

Uterusun Leiomyoadenomatoid Tümörü

Leiomyoadenomatoid Tumor of the Uterus: Case Report

Aycan KOPUZ,^a
Tuğba KARADENİZ,^b
Ayşe Yeliz KOPUZ,^a
Aykut ÖZCAN,^a
Volkan TURAN,^a
Mehmet ÖZEREN^a

^aKadın Hastalıkları ve Doğum Kliniği,
^bPatoloji Kliniği,
Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
İzmir

Geliş Tarihi/Received: 25.02.2014
Kabul Tarihi/Accepted: 26.05.2014

Yazışma Adresi/Correspondence:
Aycan KOPUZ
Tepecik Eğitim ve Araştırma Hastanesi,
Kadın Hastalıkları ve Doğum Kliniği,
İzmir,
TÜRKİYE/TURKEY
aycankopuz@hotmail.com

ÖZET Adenomatoid tümörler, kadınlarda miyometrium ve fallop tüplerinde, erkeklerde ise epididimde bulunan benign mezotelial kökenli tümörlerdir. Uterusun adenomatoid tümörleri genellikle düz kas hipertrofisi ile birlikte ve klinik olarak leiomyomla ve ovaryan kitle ile karışabilmektedir. Bu tümörlerin ayırıcı tanısı mikroskopik inceleme ile konmaktadır. Bazı olgularda tümörün düz kas komponenti, adenomatoid komponentinden fazladır ve bu tip tümörler leiomyomu taklit ettikleri için "leiomyoadenomatoid tumor" olarak adlandırılmaktadır. Bazen düz kas hücrelerinin aşırı çoğalması adenomatoid tümörü gizler ve leiomyom veya düz kas demetlerine infiltre malign tümör gibi yanlış tanı konulmasına neden olabilir. Bu nedenle leiomyoadenomatoid tümörün ayırıcı tanısında olası vasküler ve adenokarsinom komponentini dışlamak için immünohistokimyasal boyama yapılmalıdır. Biz bu makalede, 32 yaşındaki miyoma uteri ön tanısıyla opere edilen, histopatolojik incelemede leiomyoadenomatoid tümör tanısı alan bir olguyu nadir görülmesi nedeniyle sunduk.

Anahtar Kelimeler: Adenomatoid tümör; leiomyom; immünohistokimya

ABSTRACT Adenomatoid tumors are benign mesothelial tumors that are usually found in the myometrium and fallopian tubes in females and epididymis in males. Adenomatoid tumors of uterus are usually along with smooth muscle hypertrophy and can be misdiagnosed as leiomyom or ovarian mass clinically. Differential diagnosis should be revealed under microscopic examination. In some cases, smooth muscle component is more than adenomatoid component and these kind of tumors are named as leiomyoadenomatoid tumor as they mimic leiomyom. Some times, excessive proliferation of smooth muscle is hide to adenomatoid tumors and these situations cause to wrong diagnosis such as malignant tumor which is infiltrated bundle of smooth muscles. Therefore immunohistochemistry must be performed for exclude to component of vascular and adenocarcinoma in diagnosis of leiadenomatoid tumors. Here, we aimed to present a rarely seen case of leiomyoadenomatoid tumor of the uterus in a 32-year-old woman who was operated because of myoma uteri, however histopathologic examination revealed leiomyoadenomatoid tumor.

Key Words: Adenomatoid tumor; leiomyoma; immunohistochemistry

Türkiye Klinikleri J Gynecol Obst 2015;25(2):125-8

Adenomatoid tümör (AT)'ler, kadınlarda miyometrium ve fallop tüplerinde, erkeklerde ise epididimde bulunan bez benzeri yapılar oluşturan benign mezotelial kökenli tümörlerdir.¹ Kadın genital sisteminde AT en sık tubalarda, nadir olarak da uterus ve over hilusunda gözükabilmektedir.² Daha seyrek olarak bu neoplazm adrenal gland, omentum, intestinal mezenter gibi ekstragenital bölgelerde de köken alabilmektedir.³ AT'lar çoğu zaman aseptomatik olduğundan başka nedenler ile ameliyat edilmiş hastaların patoloji spesmeninde rastlantısal olarak saptanırlar. AT'lerin

insidansının %1 olduğunu bildiren yayınlar mevcut olmakla birlikte, son yıllarda yapılan bir çalışmada, bilinenin aksine immünohistokimyasal çalışma ile uterusun adenomatoid tümör insidansının %5 olduğunu ortaya koymuştur.⁴⁻⁶ AT, benign olmalarına rağmen görünüşleri overyan seks kord tümörünü andıran uterin tümör, adenomiyom, malign mezotelyoma, hemanjiyom ve lenfanjiyom ile ayırıcı tanısı yapılması gereken tümörlerdir.⁷

Uterusun adenomatoid tümörleri genellikle düz kas hipertrofisi ile birlikte. Bazı olgularda ise tümörün düz kas komponenti, adneomatoid komponentinden fazladır ve bu tip tümörler leiomyomu taklit etikleri için "leiomyoadenomatoid tümör" olarak adlandırılmaktadır.⁸ Leiomyoadenomatoid tümör ilk defa Epstein tarafından adenomatoid tümörün alt tipi şeklinde tariflense de bazı yazarlar tarafından mezomiyoma şeklinde tanımlanmaktadır. Literatürde şu ana kadar bu tanıma uyan çok fazla vaka tanımlanmamıştır.⁸⁻¹⁵ Bizde bu makalede, 32 yaşındaki hastada nadir gözükten leiomyoadenomatoid tümör olgusunu sunduk.

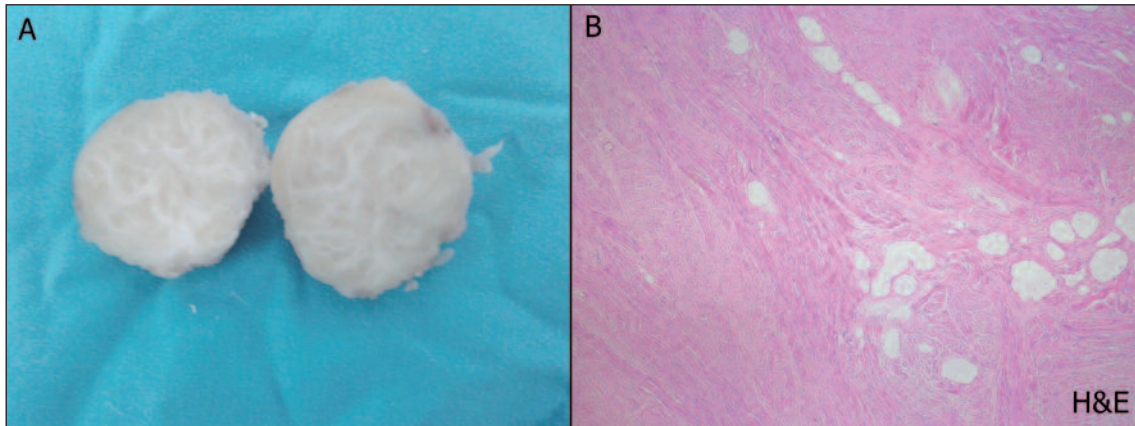
OLGU SUNUMU

Otuz iki yaşında, gravide 3, parite 2 olan, son altı aydır menometroraji ve dismenore tarifleyen hastaya yapılan muayenede ve transvajinal ultrasonda, intramural yerleşimli heterojen karakterde, 4x4 cm'lik miyom saptandı. Hastanın medikal geçmişinde herhangi bir hastalık ve sezaryen haricinde operasyon öyküsü yoktu. Hastada yoğun menoraji septomlarının varlığı ve geçirilmiş sezaryen operas-

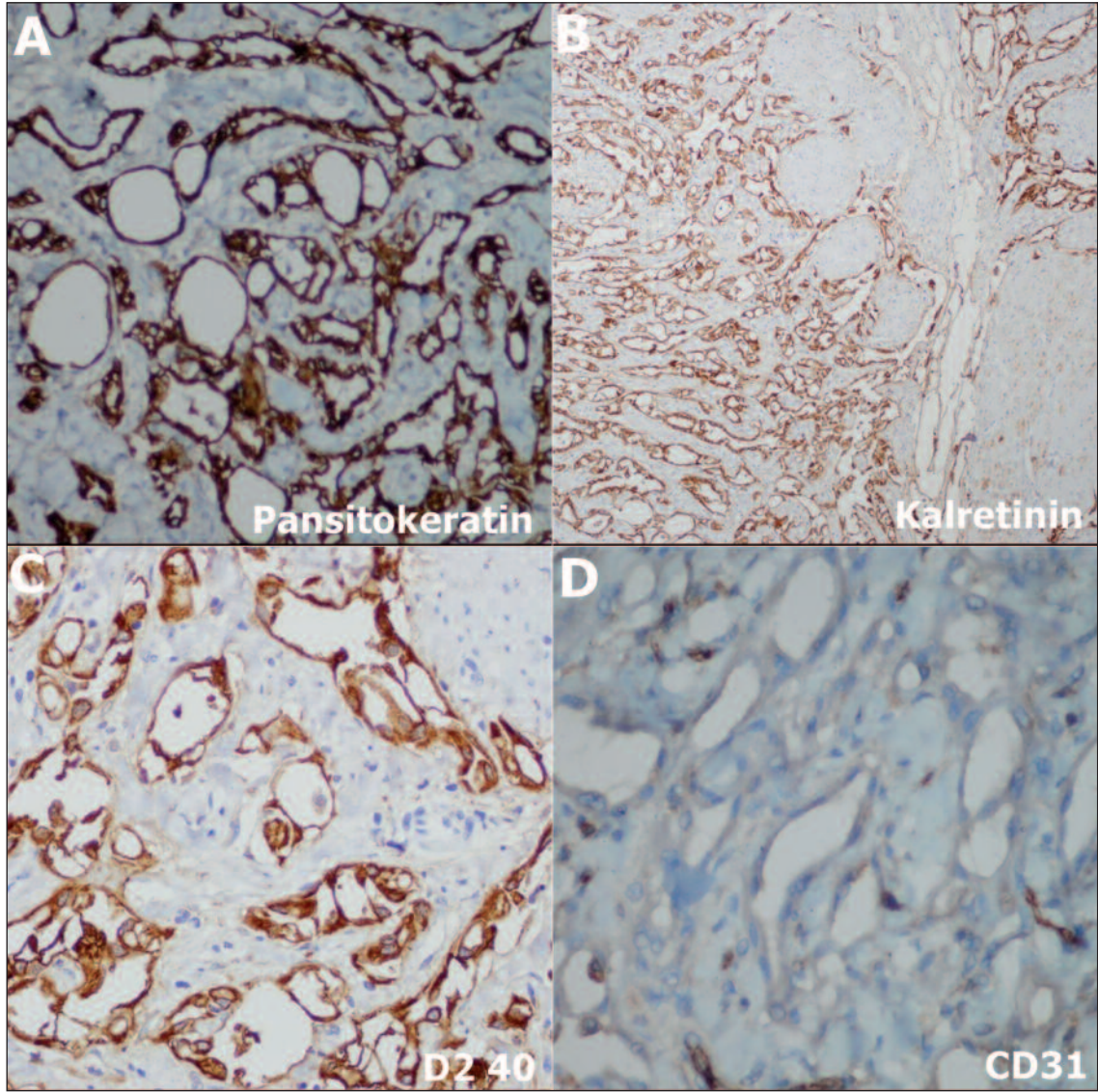
yonunun olması nedeniyle laparotomik operasyona alındı. Operasyonda uteus anteriordan intramural miyom nüvesi çıkartıldı. İntraoperatif gözlemlerde uterus ve adneksler normal olarak izlendi. Çıkarılan miyom nüvesi patolojiye gönderildi. Makroskopik olarak materyal, 4x4x3,5 cm ölçülerde, düzgün sınırlı, beyaz-krem renginde, kesit yüzü harelili görünümde nodüler bir lezyonu (Resim 1A). Mikroskopik incelemede, x50 büyütmede geniş alanlarda birbirini çaprazlayan düz kas demetleri arasında, irili ufaklı değişik boyutlarda kistik boşluklar görüldü (Resim 1B). Damarları andıran kistik boşluklar kübik veya yassı epitelle döşeli olup lümenlerinde herhangi bir sekret içermemekteydi. Bu alanlarda selüler atipi veya mitoz izlenmedi. Lezyonun mezotelial kökenine yönelik uygulanan immünohistokimyasal boyamalardan kalretinin ve D2-40 pozitif, epitelial kökenine yönelik pansitokeratin pozitif, damar kökenine yönelik yapılan CD31, CD34 ve Faktör 8 negatif olarak saptandı (Resim 2). Metastatik ya da primer bir adenokarsinom ayırıcı tanısına yönelik uygulanan karsinoembriyonik antijen (CEA) immünohistokimyasal boyası negatifti. Aktin ve desmin çevrede bulunan düz kaslarda pozitif izlenirken, bu kistik boşluklarda negatif olarak saptandı. Ki67 ile kistik boşlukları döşeyen hücrelerde boyanma izlenmezken, düz kas liflerinde %1 oranında pozitif saptandı.

TARTIŞMA

AT'lar ilk defa 1945 yılında Golden ve Ash tarafından tanımlanmıştır.¹⁶ İmmünohistokimyasal



RESİM 1: A) Leiomyoadenomatoid tümörün makroskopik görünümü; **B)** Düz kas lifleri arasındaki kistik boşluklar (x50).



RESİM 2: Leiomyoadenomatoid tümörün immünohistokimyasal incelenmesi. **A)** Pansitokeratin ile kistik yapılar pozitif x400, **B)** Kalretinin ile kistik yapılar pozitif x100, **C)** D2-40 ile kistik yapılar pozitif x400, **D)** CD 31 ile kistik yapılar negatif x400.

çalışmalar sonucu mezoteliyal kökenden geliştiği belirlenen bu tümörler genellikle asemptomatik ve nadir görülürler. AT'lerin insidansının birçok yayında %1'ler civarında olduğu bildirilmiş olmasına rağmen, gerçek insidansın belirlenmesi için yapılan son yayında immünohistokimyasal boyamanın kullanımı ile AT insidansının %5'ler civarında olduğu gösterilmiştir.⁴⁻⁶ AT'ler, genellikle 4 cm'yi geçmeyen tek bir lezyon olarak uterin korpusta subserozal ve intramural yerleşimli olup, nadiren de kornual bölgelerde saptanabilmektedirler. AT'ler klinik olarak leiomyomla ve ovaryan kitle ile karışabilmektedir. Bu tümörlerin ovaryan kitleden ayırıcı tanısı

intraoperatif olarak konulsa da leiomyomdan ayırıcı tanısı histopatolojik inceleme olarak konmaktadır. Makroskobik olarak adenomatoid tümörün leiomyomdan ayrılması çok zordur. Ancak bazı adenomatoid tümörlerin leiomyoma göre daha sarımsı ve yumuşak olduğu da bilinmektedir.¹¹ Aynı zamanda bu tümörlerde histolojik olarak da malign epitelyal veya mezotelyal karsinomlar ile ayırıcı tanısının yapılması gerekmektedir.

Düz kas hücrelerinin baskın olduğu adenomatoid tümörleri tanımlayan "Leiomyoadenomatoid tümör" terimi, ilk defa 1992 yılında Epstein tarafından tariflenmiştir.¹⁴ Bazen düz kas hücrele-

rinin aşırı çoğalması adenomatoid tümörü gizler ve leiomyom veya düz kas demetlerine infiltrate malign tümör gibi yanlış tanı konulmasına neden olabilir.⁹ Bu nedenle leiomyoadenomatoid tümörün ayırıcı tanısında olası vasküler ve adenokarsinom komponentini dışlamak için immünohistokimyasal boyama yapılmalıdır. Patolojik incelemede belirgin atipi ve mitozun yokluğu, kalretinin ve sitokeratin pozitifliği, CEA'nın negatifliği, lezyonun mezotelial kökenini destekler ve leiomyoadenomatoid tümör tanısını koydurur.¹⁷

Yaptığımız araştırmalar sonucunda literatürde şu ana kadar çok az vakada leiomyoadenomatoid tümör rapor edilmiştir.⁸⁻¹⁴ Bu vakalardan erkeklerde görülenler genelde epididimde olup, kadınlarda ise daha çok uterusu gözükmeydi. Literatür incelendiğinde sadece bir olguda tümör multisentrik olarak bulunmuş olup, diğer vakalarda tek odaklı tümör saptanmıştır. Rapor edilen olguların 24 ile 57 yaş aralığında olup, en büyük tümör boyutu 5 cm idi. Tüm kadın vakalar leiomyom ön tanısı ile opere edilmişlerdi.

Biz de olgumuzu menometrorajiye neden olan submüköz leiomyom ön tanısı ile operasyona aldık. Kitlenin patolojik incelemesinde düz kas lifleri içerisinde, duvarı kübik ve yassı epitelle çevrili kistik boşluklar izlendi. Mikroskopik incelemede bu boşlukların lenfovasküler alanlar olduğu düşünüldü, immünohistokimyasal boyama yapıldı. Bu boşlukları döşeyen epitelin mezotelial kökeni için kullanılan pansitokeratin, kalretinin ve D2-40 pozitif, lenfovasküler kökeni için kullanılan CD31 ve CD34 negatif olarak saptandı. İmmünohistokimyasal boyama sonrası bu boşlukların mezotel kaynaklı adenomatoid tümör tanısı konuldu. Ancak kitleye bir bütün olarak bakıldığında düz kas hücrelerinin çoğunlukta olduğunu gördük ve patolojik tanıyı çok nadir gözükten leiomyoadenomatoid tümör olarak değiştirdik. Sonuç olarak, her ne kadar bu tümör benign karakterde olup, hastanın prognozunu etkilemese de, yine de olası malignite komponentlerinin dışlanması, ayırıcı tanıda leiomyom ve düz kas demetlerine infiltrate malign tümörü dışlamak için gerekli immünohistokimyasal çalışmalar ile patolojik inceleme yapılmalıdır.

KAYNAKLAR

- Hendrickson MR, Tavassoli FA, Kempson RL, McCluggage WG, Haller U, Kubik Huch RA. Mesenchymal tumors and related lesions. In: Tavassoli FA, Devilee P, eds. WHO Classification of Tumors, Pathology and Genetics, Tumors of the Breast and Female Genital Organs. 5th ed. Lyon: IARC Press; 2003. p.243-4.
- Bolat F, Koçer N, Bal N, Küçüköz U. Adenomatoid tumour of the female genital tract: Report of three cases. Turk J Pathol 2007;23(2): 98-102.
- Li S, Wang X, Zhang S. Adenomatoid tumor of adrenal gland: a rare case report. Indian J Pathol Microbiol 2013;56(3):319-21
- Tiltman AJ. Adenomatoid tumours of the uterus. Histopathology 1980;4(4):437-43.
- Sieunarine K, Cowie AS, Bartlett JD, Lindsay I, Smith JR. A novel approach in the management of a recurrent adenomatoid tumor of the uterus utilizing a Strassman technique. Int J Gynecol Cancer 2005;15(4):671-5.
- Nakayama H, Teramoto H, Teramoto M. True incidence of uterine adenomatoid tumors. Biomed Rep 2013;1(3):352-354.
- Yıldız E, Cevit R, Arıkan G. [Adenomatoid tumor of the uterus: Morphological, histochemical and immunohistochemical findings in two cases]. Turkish Journal of Ecopathology 1999;5(1-2):48-52.
- Hong R, Choi DY, Choi SJ, Lim SC. Multicentric infarcted leiomyoadenomatoid tumor: a case report. Int J Clin Exp Pathol 2009;2(1): 99-103.
- Amre R, Constantino J, Lu S, Charney D. Pathologic quiz case: a 52-year-old woman with a uterine mass. Leiomyo-adenomatoid tumor of the uterus. Arch Pathol Lab Med 2005;129(3):e77-8.
- Amérigo J, Amérigo-Góngora M, Giménez-Pizarro A, Velasco FJ, Gallardo SP, González-Cámpora R. Leiomyo-adenomatoid tumor of the uterus: a distinct morphological entity? Arch Gynecol Obstet 2010; 282(4):451-4.
- Erra S, Pastormerlo M, Gregori G, Costamagna D, Pavesi M. A case of leiomyoadenomatoid tumour of uterine serosa: speculations about differential diagnosis. BMJ Case Rep 2009;2009. doi: 10.1136/bcr.02.2009.1586.
- Kausch I, Galle J, Buttner H, Bohle A, Jocham D. Leiomyo-adenomatoid tumor of the epididymis. J Urol 2002;168(2):636.
- Dobrosz Z, Paleń P, Własczuczuk P, Stojko R. An atypical leiomyoadenomatoid tumor of the uterus--a case report and literature review. Ginekol Pol 2013;84(8):730-2.
- Epstein JI. Differential Diagnosis in Pathology: Urologic Disorders. 1st ed. New York, NY: Igasku-Shoin; 1992. p.173-4.
- Prangsgaard T, Lykke R, Hansen ES. Leiomyo-adenomatoid tumor of the uterus: Report of a rare entity. J Gynecol Surg 2013;29(4):219-21.
- Golden A, Ash JE. Adenomatoid tumors of the genital tract. Am J Pathol 1945;21(1):63-79.
- Irikoma M, Takahashi K, Kurioka H, Miyazaki K, Kamei T. Uterine adenomatoid tumors confirmed by immunohistochemical staining. Arch Gynecol Obstet 2001;265(3):151-4.